



TITLE:

骨盤内動静脈奇形の1例

AUTHOR(S):

鈴木, 光太郎; 楠田, 雄司; 山田, 裕二; 野瀬, 隆一郎;
松井, 隆; 三田, 裕樹; 森, 岳樹; 杉本, 幸司

CITATION:

鈴木, 光太郎 ...[et al]. 骨盤内動静脈奇形の1例. 泌尿器科紀要 2013,
59(7): 439-442

ISSUE DATE:

2013-07

URL:

<http://hdl.handle.net/2433/177502>

RIGHT:

許諾条件により本文は2014-08-01に公開

骨盤内動静脈奇形の1例

鈴木光太郎¹, 楠田 雄司¹, 山田 裕二¹, 野瀬隆一郎²松井 隆², 三田 裕樹³, 森 岳樹³, 杉本 幸司³¹兵庫県立尼崎病院泌尿器科, ²神戸赤十字病院泌尿器科, ³神戸赤十字病院放射線科

PELVIC ARTERIOVENOUS MALFORMATION: A CASE REPORT

Kotaro SUZUKI¹, Yuji KUSUDA¹, Yuji YAMADA¹, Ryuichiro NOSE²,
Takashi MATSUI², Yuki SANDA³, Takeki MORI³ and Koji SUGIMOTO³¹The Department of Urology, Hyogo Pref Hospital²The Department of Urology, Japanese Red Cross Kobe Hospital³The Department of Radiology, Japanese Red Cross Kobe Hospital

A 70-year-old male presented with intermittent macroscopic hematuria. There was no history of previous trauma or pelvic operation. At first, we were unable to clarify the origin of the hematuria, but 3D-computed tomography revealed an arteriovenous malformation (AVM) consisting of multiple feeding vessels arising from the bilateral, especially right, internal iliac artery. Treatment with transcatheter arterial embolization (TAE) with a combination of lipiodol and N-butyl-2-cyanoacrylate twice was effective. He needs to be followed up carefully for recurrence of AVM.

(Hinyokika Kiyo 59 : 439-442, 2013)

Key words : Pelvic arteriovenous malformation, TAE

緒 言

動静脈奇形 (arteriovenous malformation) の多くは顔面, 脳, 四肢, 腎臓などに発生するが, 骨盤内の動静脈奇形は非常に稀である. 今回, 肉眼的血尿を契機に発見された骨盤内動静脈奇形の1例を経験したので報告する.

症 例

患者: 70歳, 男性

主訴: 肉眼的血尿

既往歴: 64歳時, 胃癌にて胃全摘術. 気管支喘息. 外傷歴, 骨盤内臓器の手術歴はなし.

家族歴: 特記すべき事項なし.

現病歴: 2003年頃よりしばしば肉眼的血尿を認めていた. 2008年に当科初診となり, 明らかな異常は指摘されず自然軽快していたが, 2011年10月に再受診となった.

入院時現症: 身長 166 cm, 体重 63.8 kg, 体温 37.1°C, 心拍数80回/分, 血圧 144/91 mmHg, 上腹部正中に手術痕あり, 前立腺は胡桃大, 弾性硬, 拍動は触知せず.

血液・尿検査所見: 血液検査では小球性貧血を認める以外は異常なく, PSA, CEA, CA19-9 はいずれも基準値範囲内であった. 尿沈渣では赤血球多数を認めたが, 尿細胞診は陰性であった.

画像所見: 膀胱鏡では, 膀胱内に血腫が充満してお

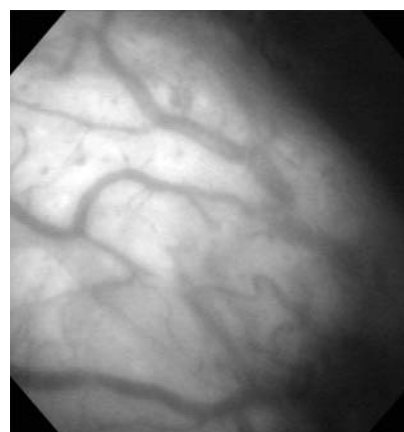


Fig. 1. Cystoscopy demonstrated diffuse dilated vessels of bladder.

り, 膀胱洗浄にて可及的に除去した後に再度観察すると, 前立腺の腫大, 前立腺部尿道の充血, 膀胱壁の血管怒張 (Fig. 1) を認めたが明らかな出血源は同定できなかった.

臨床経過: 前立腺肥大症による尿道出血の可能性を考え, クロルマジノン酢酸エステル (プロスタール®) の内服にて外来で経過をみる方針としたが, 血尿は軽快増悪を繰り返し, 2011年12月に膀胱タンポナーデを来たして緊急入院となった. 入院後に施行した腹部造影 3DCT にて右内腸骨動静脈領域における異常血管の増生 (Fig. 2, 3) を認め, 骨盤内動静脈奇形と診断した.

治療は経カテーテル動脈塞栓術 (TAE: transcatheter



Fig. 2. Contrast-enhanced CT scan shows the dilated and tortuous vessels on the right side of the pelvis.



Fig. 3. 3D-CT scan shows arteriovenous malformation consisting of multiple feeding vessels arising from the right internal iliac artery.

arterial embolization) が選択され、2012年1月に1回目のTAEが施行された。血管造影では、右優位に両側の異常血管（以下 nidus）増生と早期静脈還流像を認めた（Fig. 4）。塞栓物質はNBCA（n-butyl-2-cyano-

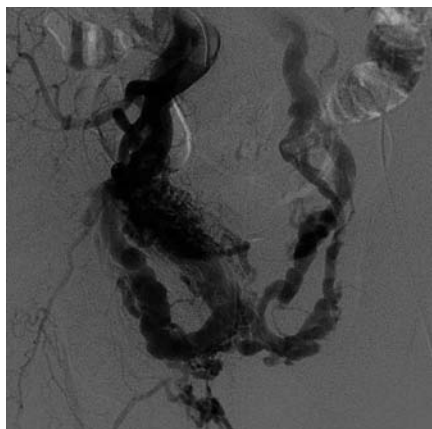


Fig. 4. Angiography shows bilateral, arteriovenous malformation and early venous return.

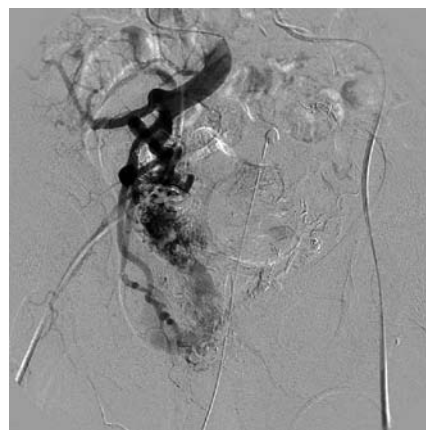


Fig. 5. After the second TAE, abnormal vessels are reduced.

acrylate) とリピオドールの混合液（混合比1:2）を使用し、両側の下膀胱動脈を塞栓した。術後、肉眼的血尿は一旦消失したが、約3週間後に再発を認めたため、2回目のTAEが施行された。右閉鎖動脈の陰茎動脈への分枝を越えた末梢の部位を塞栓した。2回にわたるTAEによりnidusは著明に縮小（Fig. 5）し、その後8カ月で血尿の再発は認めていない。

考 察

動静脈奇形は通常存在する毛細血管を介さない短絡を有し、流入血管および流出血管との間にnidusを形成する疾患で、先天性のものと、手術や外傷・妊娠などにより後天的に生じたものに分類される¹⁾。また後天的に生じ、nidusを形成しない動静脈奇形は動静脈瘻（arteriovenous fistula）と定義される場合もある^{2,3)}。

Gomesらの報告では動静脈奇形は顔面、脳、頸部、四肢、腎臓などに発生するが骨盤部には非常に少ないとされ、Mayo Clinicにおいて10年間に治療した180例の動静脈奇形のうち骨盤部に発生したのは6例であり、さらに先天性に限ると139例中1例であったと報告している⁴⁾。

身体所見としては、腹痛を伴うことや腹部触診や直腸診で拍動性腫瘍を触知することが多いとされる。また、血尿、水腎症、下肢腫脹、陰萎症などを契機に診断されることもあり、短絡量が多いと高心拍出性の心不全を来すこともあるとされる^{3,5)}。自験例では肉眼的血尿を契機に診断されたが、腹痛はなく、拍動性腫瘍も触知しなかった。

このような多彩な症状を認める一方で、Calligaroらは先天性動静脈奇形の約20%が無症状であったと報告している。無症状で増大傾向のないものに関しては経過観察が可能であるが、6カ月ごとの超音波やCTでの評価が必要であるとしている⁶⁾。

また、前立腺全摘術の術前検査で本疾患が発見された症例⁷⁾や、TURPの際に大量出血を来し、それを

Table 1. Comparison with Japanese males reported in the past 10 years

	年齢	臨床所見	栄養血管	治療法	塞栓物質	治療回数
五島ら ¹⁹⁾	65	下肢静脈瘤	左内腸骨動脈	TAE	コイル+NBCA	1
根岸ら ¹⁷⁾	25	左臀部痛, 左精巣痛	両側内腸骨動脈, 下腸間膜動脈	TAE	—	4
鬼塚ら ⁹⁾	87	無症状	右内腸骨動脈	TAE	コイル	1
林ら ²⁰⁾	52	前立腺部の拍動性腫瘍	左内腸骨動脈	TAE	コイル	1
本間ら ²¹⁾	—	無症状	両側内腸骨動脈, 上直腸動脈	経過観察	—	—
真鍋ら ²²⁾	77	無症状	右内腸骨動脈	経過観察	—	—
	54	肉眼的血尿	右内腸骨動脈	TAE	ゼラチン	2
自験例	70	肉眼的血尿	両側内腸骨動脈	TAE	NBCA	2

契機に本疾患の診断に至ったという症例の報告もあり^{8,9)}, 侵襲的な検査や手術の際には事前に本疾患を鑑別しておく必要があると考えられる。

本疾患の診断は主に画像検査で行われ, 超音波カラードップラー法, 造影 CT, 造影 MRI が有用とされているが, 確定診断や nidus の評価には血管造影が必要となる¹⁰⁻¹²⁾. MRA が診断および治療において有用であったとの報告もある¹³⁾. 自験例では 3DCT が診断に有用であった。

治療は, 以前は流入血管の結紮や異常血管部位の切除などの外科的治療が行われていたが, 流入血管の結紮は側副血行路がすぐに形成されてしまうため, 効果は乏しく, 主に緊急の場合に選択される。また再発例に対する再治療は困難であり, 出血や周囲臓器の損傷の問題もあることから, 外科的治療の適応は限局した, 完全切除を期待できる小さな病変に限られ, TAE が第一選択となることが多い^{3,14)}. TAE は侵襲が少なく, 本症例のように複数回に分けて行うことができるが, 外科的治療と同様に再発例が多いとされ, 塞栓物質による周囲臓器の虚血や肺塞栓などの問題が挙げられている¹⁵⁾. Jacobowitz らは35例の骨盤内動静脈奇形に対し TAE を行い29例で症状の改善を認めたが, 平均23.3カ月の観察期間において, 平均2.4回の治療を要したと報告している¹⁶⁾. また Calligaro らは TAE を施行した10例において平均35カ月の観察期間に 8 例で再発を認めたと報告している⁶⁾. 再治療に関しては, 症状の再発を受けて行うことが多いが, 症状は消失したものの, 画像検査にて残存病変を認め, 再治療を行ったという報告もある¹⁷⁾.

塞栓物質としては, 金属コイル, バルーン, 粒子の小さい, もしくは液体の塞栓物質 (PVA: polyvinyl alcohol や NBCA など) があるが, 金属コイルやバルーンは nidus 内に進入できず, その近位での塞栓となるため, その役割は限定的であり, PVA や NBCA は nidus の形態に合せて塞栓ができるため有用であるとされる^{12,18)}.

術後の画像評価の間隔は文献により異なるが, 前述のごとく, 無症状の症例に対し 6 カ月ごとの評価が推

奨されていることから, 術直後および, 少なくとも 6 カ月ごとの評価が好ましいと考えられる。

最近10年間の本邦における男性例の報告例は 8 例あり, 自験例を含めた 9 例について Table 1 に示す. 年齢の中央値は65歳と比較的高齢であった. 臨床所見はやはり多彩であり, 3 例で無症状であった. 栄養血管は主に内腸骨動脈であるが, 下腸間膜動脈や上直腸動脈の関与を認める症例もみられる. 治療は TAE が 6 例, 経過観察が 3 例であり, TAE にコイルのみを用いている症例が 3 例あった. 治療回数は平均 2 回であった。

自験例では, 膀胱や前立腺に接した位置に nidus が存在しており, 外科的治療では完全切除は困難であると判断し, TAE が選択された. 2 回の治療を経て, 肉眼的血尿は消失したが, 今後も十分な経過観察を要する考える。

結 語

肉眼的血尿を契機に発見され, TAE が有効であった骨盤内動静脈奇形の 1 例を経験した. 侵襲的な検査や治療を行う際には, 本疾患を鑑別に入れる必要があると考えられた。

本論文の要旨は, 第220回日本泌尿器科学会関西地方会において発表した。

文 献

- 1) Ishii T, Higashionna T, Hiratsuka Y, et al.: Trans-rectal ultrasound findings of pelvic arteriovenous malformation. *J Urol* **166**: 999, 2001
- 2) Trout III HH, McAllister Jr HA, Giordano JM, et al.: Vascular malformations. *Surgery* **97**: 36-41, 1985
- 3) Game X, Berlizot P, Hassan T, et al.: Congenital pelvic arteriovenous malformation in male patients: a rare cause of urological symptoms and role of embolization. *Eur Urol* **42**: 407-412, 2002
- 4) Gomes MM and Bernatz PE: Arteriovenous fistulas: a review and ten-year experience at the Mayo Clinic. *Mayo Clin Proc* **45**: 81-102, 1970
- 5) Akimaro Kudo F, Nishibe T, Miyazaki K, et al.:

- Congenital pelvic arteriovenous malformation : uncommon symptom of lower limb venous hypertension. *J Cardiovasc Surg* **42** : 825-827, 2001
- 6) Calligaro KD, Sedlacek TV, Savarese RP, et al. : Congenital pelvic arteriovenous malformation : long-term follow-up in two cases and a review of the literature. *J Vasc Surg* **16** : 100-108, 1992
- 7) Richards AJ, Hatrick A and Eden CG : Large pelvic arteriovenous malformation complicating laparoscopic radical prostatectomy. *Urology* **72** : 1359-1361, 2008
- 8) Touyama H, Hatano T and Ogawa Y : Massive prostatic bleeding after transurethral resection of the prostate in a patient with a congenital pelvic arteriovenous malformation. *J Urol* **160** : 1803, 1998
- 9) 鬼塚千衣, 新村研二 : 経尿道的前立腺切除中に判明した骨盤動静脈奇形の1例. *西日泌尿* **69** : 321-323, 2007
- 10) 加藤利奈, 廣田 穰, 小石奏子, ほか : 経カテーテルの動脈塞栓術が有効であった骨盤内動静脈奇形の1例. *東海産婦会誌* **40** : 77-83, 2003
- 11) Suzuki K, Tanaka N, Ebine T, et al. : Pelvic congenital arteriovenous malformation diagnosed by transrectal ultrasonography : a case report. *Can Urol Assoc J* **6** : e61-63, 2012
- 12) Suzuki K, Nishimi D, Morioka H, et al. : Hematospermia associated with congenital arteriovenous malformation of internal iliac vessels. *Int J Urol* **14** : 370-372, 2007
- 13) Bozlar U, Norton PT, Turba UC, et al. : Novel technique for evaluating complex pelvic arteriovenous malformations with catheter-directed subtracted MR angiography. *J Vasc Interv Radiol* **18** : 920-923, 2007
- 14) Hammad FT, Shawish F and Kazim E : Congenital pelvic arteriovenous malformation presenting with urinary retention : a case report. *Med Princ Pract* **20** : 294-296, 2011
- 15) Pelz DM, Lownie SP, Fox AJ, et al. : Symptomatic pulmonary complications from liquid acrylate embolization of brain arteriovenous malformation. *AJNR Am J Neuroradiol* **16** : 19-26, 1995
- 16) Jacobowitz GR, Rosen RJ, Rockman CB, et al. : Transcatheter embolization of complex pelvic vascular malformations : results and long-term follow-up. *J Vasc Surg* **33** : 51-55, 2001
- 17) 根岸孝仁, 加野雅子, 濱野克彦, ほか : 先天性骨盤内動静脈奇形の1例. *西日泌尿* **66** : 778-781, 2004
- 18) Gandini R, Angelopoulos G, Konda D, et al. : Transcatheter embolization of a large symptomatic pelvic arteriovenous malformation with glubran 2 acrylic glue. *Cardiovasc Intervent Radiol* **31** : 1030-1033, 2008
- 19) 五島雅和, 前田英明, 三室治久, ほか : 骨盤内動静脈奇形に伴う二次性下肢静脈瘤に対し, 塞栓術による動静脈瘻閉鎖後二期的に下肢静脈瘤手術可能となった1症例. *静脈学* **15** : 259-264, 2004
- 20) 林 隆則, 山口広司, 角 文宣 : 先天性骨盤内動静脈奇形の1例. *島根医* **28** : 63-67, 2008
- 21) 本間重紀, 片岡昭彦, 高橋典彦, ほか : 骨盤内動静脈奇形に合併したS状結腸癌の1例. *日本大腸肛門病会誌* **63** : 499-503, 2010
- 22) 眞鍋由美, 植垣正幸, 浅妻 顕, ほか : 先天性骨盤内動静脈奇形の2例. *泌尿紀要* **57** : 25-28, 2011

(Received on December 27, 2012)
(Accepted on February 21, 2013)